

先天性脊椎骨端異形成症 (SEDC) の内反股変形に対して 創外固定器を用いた外反骨切り術を行った 1 例

独立行政法人国立病院機構大阪南医療センター整形外科

吉田 清志

大阪大学健康体育部

大野 一幸

大阪大学大学院医学系研究科器官制御外科学整形外科

樋口 周久・清水 信幸・吉川 秀樹

要旨 先天性脊椎骨端異形成症はII型コラーゲン遺伝子異常を原因とする骨系統疾患で、体幹短縮型の低身長、椎体変形、上位頸椎の不安定性、関節可動域制限をきたし、股関節では内反股を示すことが特徴である。内反股に対する治療法として種々の内固定材を使用した矯正骨切り術が報告されてきたが、矯正不足、変形の再発、成長軟骨帯早期閉鎖、大腿骨頭壊死等が問題となってきた。今回我々は創外固定器を用いた外反骨切り術を本疾患の7歳男児の内反股に行った。比較的低侵襲で矯正角度も術前計画通りに実施でき、また術後早期から関節可動域訓練や起立訓練も可能であった。術後1年の現在、術前右113°、左102°であった頸体角は、右125°、左130°に改善し、正常に近い球状の大腿骨頭の骨化核が出現している。先天性脊椎骨端異形成症の高度の内反股に対して、創外固定を併用した外反骨切り術は有用であると考えられた。

先天性脊椎骨端異形成症 (Spondyloepiphyseal Dysplasia Congenita ; 以下, SEDC) は II 型コラーゲン遺伝子異常を原因とする骨系統疾患で、体幹短縮型の低身長、椎体変形、関節可動域制限を来とし、股関節では内反股を示すことが特徴である⁵⁾。従来 SEDC の内反股に対しては、種々の内固定材を使用した矯正骨切り術が行われてきたが¹⁾³⁾⁶⁾⁸⁾、手術侵襲も大きく、変形の再発、矯正不足、大腿骨近位成長軟骨帯の早期閉鎖、大腿骨頭壊死等が問題となってきた⁴⁾。今回我々は、創外固定器を用いた大腿骨外反骨切り術の1例を経験し、短期的ではあるが良好な成績を得たので報告する。

症 例

症 例 : 7 歳, 男児

主 訴 : 両側股部痛, 歩容異常

現病歴 : 1 歳で歩行を開始した。4 歳時に歩容異常と低身長のため近医を受診し先天性脊椎骨端異形成症と診断された。5 歳頃より起立時の股部痛が出現し、跛行も増強、階段昇降が困難になり、当科を受診した。

既往歴 : なし

家族歴 : なし

入院時所見 : 身長 95.5 cm (−5.3 SD), 体重 19 kg (−1.0 SD) の躯幹短縮型の低身長であった。歩

Key words : spondyloepiphyseal dysplasia congenita (先天性脊椎骨端異形成症), coxa vara (内反股), valgus osteotomy (外反骨切り術), external fixator (創外固定)

連絡先 : 〒 586 8521 大阪府河内長野市木戸東町 2-1 独立行政法人国立病院機構大阪南医療センター整形外科

吉田清志 電話(0721)53 5761

受付日 : 平成 17 年 2 月 23 日

図 1.

脊椎長尺立位側面像
軸椎歯突起の低形成、頸椎
椎体の軽度の扁平化、腰椎
前彎の増強を認める。



図 2. 両股関節正面像

腸骨翼の低形成、両側内反股、大腿骨頸部に tri-
angular fragment を認め、大腿骨の骨端核の骨化
は遅延している。



◀図 3.

術直後両股関節正面像
両側とも転子下で 25°外反骨切り
を行い、創外固定器にて固定した。

図 4. ▶

術後 12 か月後両股関節正面像
骨化核も正常に近い形態を呈し、
頸体角は右 125°、左 130°と保たれ
ており、Hilgenreiner angle は右
44°、左 47°と改善している。



行は Duchenne 跛行を示した。上肢および膝、足関
節に関節可動域制限を認めなかったが、股関節可
動域は両側とも屈曲 140°、内転 30°、外転 15°、内
旋 0°、外旋 45°と制限を認めた。神経学的異常所見
はなく、血液生化学検査は正常であった。

画像所見：脊椎単純 X 線像で軸椎歯突起の低
形成、椎体の軽度の扁平化、腰椎前彎の増強を認
めた(図 1)。股関節正面像で腸骨翼の低形成、両側
内反股と大腿骨頸部に triangular fragment を認
め、骨端核の骨化は年齢に比して遅延していた(図
2)。

股関節の適合性を観察し外反骨切り角度を決定
するため股関節造影を施行したところ、軟骨性の
大腿骨頭が臼蓋内にあり、頸体角は右 113°、左
102°と高度の内反股変形を示し、臼蓋との適合性
は両側とも 25°内転位で良好であった。

大腿骨近位部形態の改善とそれによる歩容改善
を目的として、両側大腿骨に対し 25°の外反骨切
り術および創外固定術を施行した(図 3)。大転子

部と骨幹部に術前に計画した矯正角度でスク
リューを刺入した後、小皮切から転子下骨切りを
行い、一期的に矯正し創外固定器で固定した。創
外固定器は、株式会社エム・イー・システム社製
下腿用デュアルロッド創外固定器 TB-1000 の
カーボン・ファイバーロッドを切断し 1/2 長とし
たものを使用した。スクリューは径 5 mm の下腿
用を用いた。術翌日から関節可動域訓練、術後 1 週
より起立訓練を開始した。ピン刺入部に感染は無
く、術後 2 か月で骨切り部の骨癒合が得られたた
め創外固定器およびスクリューを抜去した。経過
中に股関節に軽度の屈曲拘縮を生じたが、抜釘に
より改善した。現在術後 12 か月で、股部痛はなく
独歩可能で歩容は改善した。

術後 12 か月の単純 X 線両股正面像にて、大腿
骨頭に球状の骨化核を認める(図 4)。X 線計測上
では頸体角は右 125°、左 130°と矯正角度は保たれ
ていた。先天性内反股の評価法である Hil-
genreiner 線と大腿骨近位骨幹端とのなす角度で

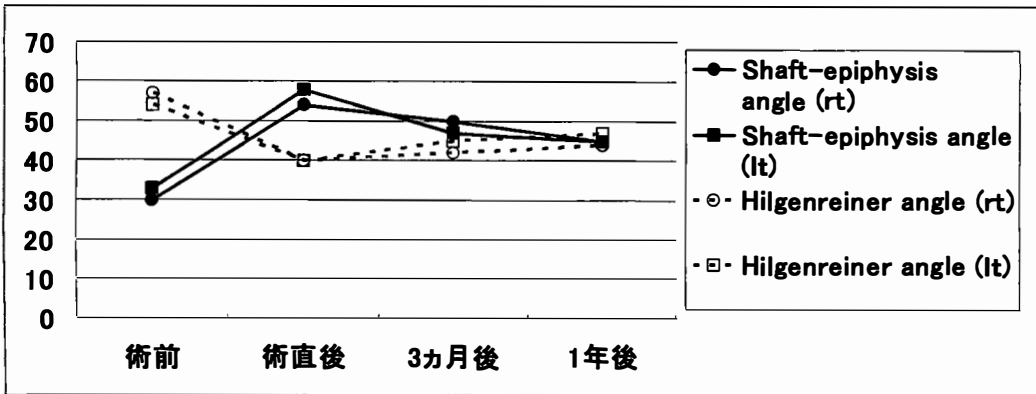


図 5. Shaft-epiphysis angle, Hilgenreiner angle の推移

ある Hilgenreiner angle, 大腿骨骨幹部長軸と大腿骨近位成長軟骨帯とのなす角度である shaft-epiphysis angle を検討したところ, Hilgenreiner angle は術前右 57°, 左 54°であったものが, 術直後には右 40°, 左 40°, 現在では右 44°, 左 47°と改善した(図 5). Shaft-epiphysis angle は術前右 30°, 左 33°であったものが術直後に右 54°, 左 58°, 現在では左右とも 45°と改善を認めた(図 5).

考 察

SEDC や先天性内反股に対して, 従来転子下または転子間でのプレート¹⁶⁾や Kirschner 鋼線³⁾⁸⁾による内固定を用いた外反骨切り術が行われてきた. こうした方法の問題点として, ①内固定単独では固定力が弱く術後 4~6 週間の股関節ギプスが必要になる, ②軟部組織への侵襲が大きい, ③プレートを使用的場合骨切り角度に制限が生じる, ④術後合併症として骨頭方向にスクリューや Kirschner 鋼線を刺入する場合, 成長軟骨帯の早期閉鎖や大腿骨頭壊死が生じる可能性があることが挙げられている⁴⁾.

そこで今回我々は SEDC の内反股に対し, より侵襲の少ない方法である創外固定器を用いた外反骨切り術を施行した. 今回使用した創外固定器はロッド部分がカーボン・ファイバー製のため軽量で, ロッド部を半割することで小児にも使用可能であり, 5 mm 径のスクリューを使用したため良好な固定性が得られた.

創外固定器を用いる利点としては, 骨切り角度の調節が可能である, 侵襲が少ない, 早期より関節運動と生理的な荷重を股関節に負荷できることが挙げられる. 一方欠点として, 大腿筋膜をスクリューが貫くために股関節の一過性の可動域制限が生じること, スクリューの刺入部感染の危険性があること, 創外固定器を装着していることによる患児の精神的なストレスが挙げられるが, 本例では刺入部の注意深い管理, 抜釘後の十分な理学療法で対処可能であった.

SEDC の場合には内反股の矯正の目標は報告されていないが, 先天性内反股では, Carroll らは, Hilgenreiner angle が術後 38°以下であれば再発はみられなかったと報告している²⁾. また Weinstein らは先天性内反股では, Hilgenreiner angle が 45°以下の場合には自然矯正されると述べている⁷⁾. 本例は Hilgenreiner angle を指標とせず, 関節の適合性を重視して, 25°の外反骨切りを行ったため, 術後 1 年の時点での Hilgenreiner angle は左右それぞれ, 47°, 44°であり, 今後再発に関して慎重な経過観察が必要であると思われる.

まとめ

SEDC の内反股に対する外反骨切り術に創外固定器を用いることで, 術前計画した角度で固定することができた. また早期に関節運動と荷重を負荷できることで, 術後 12 か月の現在, 球状の骨化核が出現し, 変形の再発もきたしておらず, 良

好な成績が得られたと考える。今後内反股の再発
に関して慎重な経過観察が必要である。

文 献

- 1) Burns KA, Stevens PM : Coxa vara : Another option for fixation. J Pediatr Orthop **10** : 304-310, 2001.
- 2) Carroll K, Coleman S, Stevens PM : Coxa vara : Surgical outcomes of valgus osteotomies. J Pediatr Orthop **17** : 220-224, 1997.
- 3) Cordes S, Dickens DR, Cole WG : Correction of coxa vara in childhood. The use of Pauwels' Y-shaped osteotomy. J Bone Joint Surg **73-B** : 3-6, 1991.
- 4) Desai SS, Johnson LO : Long-term results of valgus osteotomy for congenital coxa vara. Clin Orthop **294** : 204-210, 1993.
- 5) 中島康晴, 野口康男, 窪田秀明ほか : 先天性脊椎・骨端異形成症 (SEDC) およびその類似疾患の股関節病変。骨・関節・靭帯 **15** : 987-993, 2002.
- 6) Skaggs DL, DuBois B, Kay RM et al : A simplified valgus osteotomy of the proximal femur in children. J Pediatr Orthop B **9** : 114-118, 2000.
- 7) Weinstein JN, Kuo KN, Millar EA : Congenital coxa vara. A retrospective review. J Pediatr Orthop **4** : 70-77, 1984.
- 8) Widmann RF, Hresko MT, Kasser JR et al : Wagner multiple K-wire osteosynthesis to correct coxa vara in the young child : Experience with a versatile 'Tailor-Made' high angle blade plate equivalent. J Pediatr Orthop B **10** : 43-50, 2001.

Abstract

Valgus Osteotomy Using External Fixators to Correct Bilateral Coxa Vara Caused by Spondyloepiphyseal Dysplasia Congenita : A Case Study

Kiyoshi Yoshida, M.D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, National Hospital Organization,
Osaka Minami Medical Center

Spondyloepiphyseal dysplasia congenita belongs to a family of bone dysplasia with mutations in the type II collagen gene. Its clinical features are short trunk dwarfism, C 1/2 instability and marked coxa vara. The coxa vara deformity is usually treated through valgus intertrochanteric or subtrochanteric osteotomy using various plates or wires for internal fixation. However, these conventional methods have several complications including recurrence and undercorrection of the deformity, premature closure of the proximal femoral physis and osteonecrosis in the femoral head. Here, we report treatment through valgus subtrochanteric osteotomy using external fixators to treat the bilateral coxa vara deformities in a seven year old boy with spondyloepiphyseal dysplasia congenita. With external fixation, osteotomy could be minimally invasive, and the neck shaft angle could be easily adjustable at operation. After the operation, ROM exercises for the hip and knee joints could start immediately. Then at 2 months later, bony union at the sites of osteotomy was achieved, and the external fixators were removed. At the one-year follow up, the neck shaft angles were at the 125° (113° before operation) in the right, and 130° (102°) in the left and the femoral heads showed round shaped epiphyses. Accordingly, this valgus subtrochanteric osteotomy using external fixation was concluded to be a safe and useful procedure to treat coxa vara caused by spondyloepiphyseal dysplasia.